

Lesões isoladas do seio esfenoidal: Casuística de um centro hospitalar terciário

Artigo Original

Autores

Mariana Caetano

Serviço de Otorrinolaringologia Centro Hospitalar Lisboa Norte, Portugal

Vítor Oliveira

Serviço de Otorrinolaringologia Centro Hospitalar Lisboa Norte, Portugal

Diogo Tomé

Serviço de Otorrinolaringologia Centro Hospitalar Lisboa Norte, Portugal

Leonel Luís

Serviço de Otorrinolaringologia Centro Hospitalar Lisboa Norte, Portugal

Correspondência:

Mariana Caetano
mariana.filipa.caetano@gmail.com

Artigo recebido a 5 de Maio de 2022.

Aceite para publicação a 2 de Outubro de 2022.

Resumo

Objetivos: Caracterização da clínica e principais etiologias de lesões isoladas do seio esfenoidal, através da análise da casuística de um centro hospitalar terciário.

Desenho do Estudo, Material e Métodos: Estudo retrospectivo de doentes com lesões isoladas do seio esfenoidal submetidos a abordagem endoscópica nasossinusal, entre Janeiro de 2017 e Dezembro de 2021.

Resultados: Foram selecionados 19 doentes, com idade média de 48.0 ± 18.7 anos. O sintoma mais comum foi a cefaleia (38.9%) seguido de obstrução nasal (33.3%). As neuropatias cranianas ocorreram exclusivamente no grupo das neoplasias malignas. A etiologia inflamatória foi a mais frequente (57.9%), incluindo sinusite fúngica (27%), rinosinusite crónica (18%) e mucocelo (5%).

Conclusões: O diagnóstico de lesões isoladas do seio esfenoidal requer um elevado grau de suspeição pela sintomatologia inespecífica com que se apresentam. A intervenção cirúrgica precoce, com intuito diagnóstico ou terapêutico, está geralmente indicada, sendo a cirurgia endoscópica nasossinusal a modalidade mais adequada na maioria dos casos.

Palavras-chave: Seio esfenoidal; rinosinusite; lesão isolada

Introdução

As lesões isoladas do seio esfenoidal representam 1 a 2.7% de todas as lesões dos seios paranasais.^{1,2} A maioria é de natureza inflamatória, com a etiologia neoplásica a representar apenas 15 a 16% dos casos.^{3,4} Apesar da crescente utilização de modalidades de imagem, como a tomografia computadorizada (TC) e a ressonância magnética (RM), ter contribuído para um aumento da frequência diagnóstica, as lesões isoladas do seio esfenoidal permanecem um desafio diagnóstico face à clínica insidiosa e inespecífica com que se apresentam.^{1,5} O sintoma mais comum é a

cefaleia, frontal ou retroorbitária, que pode surgir associada a sintomas nasossinusais como rinorreia, obstrução nasal, hipósmia ou epistáxis.^{6,7} Apesar da estreita relação do seio esfenoidal com a dura mater, pares cranianos (III, IV, VI, V2 e VI), quiasma e nervos óticos, seio cavernoso, hipófise, artéria carótida interna, gânglio esfenopalatino, artéria esfenopalatina e canal pterigoideu, os sintomas decorrentes do envolvimento das estruturas anatómicas vizinhas são menos frequentes e de apresentação tardia.⁷⁻⁹ No presente estudo retrospectivo, os autores propõem-se a analisar a etiologia, sintomatologia, diagnóstico e outcomes cirúrgicos, de uma amostra de 19 doentes com patologia isolada do seio esfenoidal submetidos a intervenção endoscópica nasossinusal diagnóstica ou terapêutica.

Material e Métodos

Estudo retrospectivo e descritivo de doentes diagnosticados com lesões isoladas do seio esfenoidal que foram submetidos a abordagem endoscópica nasossinusal com intuito diagnóstico ou terapêutico, entre Janeiro de 2017 e Dezembro de 2021. Para cada doente foram analisadas as seguintes variáveis: sexo, idade, sintomas de apresentação, meios de diagnóstico, etiologia, estudo microbiológico e anátomo-patológico, cirurgia efetuada, outcome cirúrgico relativo à ressecção macroscópica da lesão, sempre que aplicável.

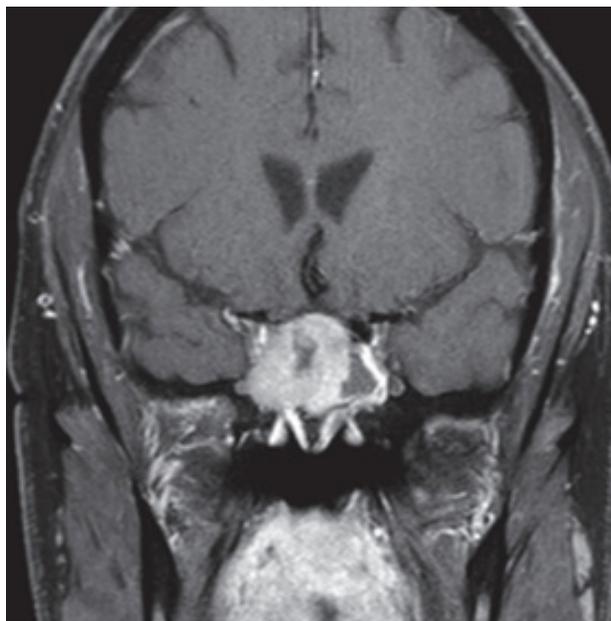
Resultados

Foram incluídos 19 doentes, 73,7% (n=14) eram do género masculino. A idade variou entre 15 e 77 anos, apresentando uma média de 48,0 ± 18,7 anos.

Foram identificadas 11 lesões de etiologia inflamatória (57,9%), incluindo 6 sinusites fúngicas (1 invasiva) e 1 mucocelo, e 7 lesões neoplásicas (36,8%), das quais 3 eram malignas (neoplasias secundárias metastáticas).

Adicionalmente, foi incluído 1 caso de fistula de líquido cefalorraquidiano espontânea em doente sem história prévia de cirurgia nasossinusal ou traumatismo cranioencefálico.

Figura 1
RM de doente com sarcoma mielóide esfenoidal, corte coronal em ponderação T1 com gadolínio.



O sintoma mais frequente foi a cefaleia ou a dor retroorbitária (n=7, 38,9%), seguido de obstrução nasal (n=6, 33,3%). Rinorreia posterior (n=1, 5,3%) e rinorreia anterior purulenta (n=1, 5,3%), foram reportadas apenas nos casos de micetoma esfenoidal e de displasia fibrosa, respetivamente. Sintomas compatíveis com o compromisso de pares cranianos ocorreram exclusivamente no grupo das neoplasias malignas, com 2 doentes a reportarem diplopia, 1 doente com ptose palpebral, 1 doente com hipoestesia da face e 1 doente com diminuição da acuidade visual. Em 5 doentes (27,8%) tratou-se de um diagnóstico incidental em exames de imagem, em doentes assintomáticos. A distribuição de sintomas de acordo com o grupo de diagnóstico encontra-se listada na tabela 2.

Para o estabelecimento inicial do diagnóstico, todos os doentes realizaram pelo menos uma avaliação imagiológica: 13 (68,4%) doentes realizaram TC complementada por RM e 6 (31,6%) doentes apenas realizaram TC. No grupo cuja avaliação imagiológica foi complementada por RM, estão incluídas a totalidade das neoplasias malignas, a fistula de líquido cefalorraquidiano espontânea e o

Tabela 1
Distribuição das patologias identificadas, por categoria diagnóstica.

Grupo de diagnóstico		Número (%) de doentes	Observações
Patologia inflamatória (n=11, 57.9%)	RSCcPN localizada	2 (9 %)	
	RSCsPN localizada	2 (9 %)	1 Iatrogénico, status pós cirurgia de exérese de macroadenoma da hipófise via transfenoidal
	Sinusite fúngica	6 (27%)	Invasiva (n=1), Não invasiva (n=5, incluindo 4 Micetoma e 1 RSFA)
	Mucocelo	1 (5 %)	
Patologia neoplásica (n=7, 36.8%)	Benigna	4 (18 %)	Papiloma invertido (n=2), Displasia fibrosa (n=1), Glomangiopericitoma (n=1)
	Maligna	3 (27 %)	Metástase de carcinoma urotelial (n=1), Metástase paraclival de carcinoma folicular da tiróide (n=1), Sarcoma Mielóide (n=1)
Outros (n=1, 5.3 %)		1 (5.3 %)	Fístula de líquido cefalorraquidiano espontânea

RSCcPN – Rinossinusite crónica com pólipos nasais; RSCsPN - Rinossinusite crónica sem pólipos nasais; RSFA – Rinossinusite fúngica alérgica.

único caso de rinossinusite fúngica invasiva. Nos doentes com o diagnóstico de sinusite fúngica e de rinossinusite crónica sem pólipos nasais, amostras recolhidas intraoperatoriamente foram submetidas a exame bacteriológico e micológico, cujo resultado se encontra listado na tabela 3. O *Aspergillus sp.* representou a estirpe mais frequentemente isolada no exame micológico. No doente com rinossinusite fúngica alérgica, o exame cultural revelou, além de *Schizophyllum sp.*, o isolamento de *Klebsiella pneumoniae* e *Streptococcus*

anginosus. Em 4 doentes, incluindo 3 com o diagnóstico de micetoma esfenoidal, o exame cultural foi negativo.

Com exceção do doente com rinossinusite fúngica invasiva e de 2 doentes com neoplasia secundária metastática (intervenção endoscópica com intuito diagnóstico), a remoção macroscópica completa das lesões foi conseguida através de abordagem endoscópica transnasal (n=12, 63,2%) ou transetmoidal (n=9, 47,4%), sem complicações pós-operatórias.

Tabela 2
Sintomas reportados de acordo com a categoria diagnóstica.

Categoria diagnóstica (N, %)	Sintomas de apresentação (N, %)					
	Cefaleia	Obstrução nasal	Rinorreia Posterior	Rinorreia Anterior	Neuropatia craniana	Rinorráquia
Patologia Inflamatória (n= 11, 57.9%)	5 (26.3%)	3 (15.8%)	1 (5.3%)	0 (0)	0 (0)	0 (0)
Patologia neoplásica (n= 7, 36.8%)	2 (10.5%)	3 (15.8%)	0 (0)	1 (5.3%)	2 (10.5%)	0 (0)
Outros* (n=1, 5.3%)	0 (0)	0 (0)	0 (0)	0 (0)	0 (0)	1 (5.3%)
Total (N=19)	7 (36.8%)	6 (31.6%)	1 (5.3%)	1 (5.3%)	2 (10.5%)	1 (5.3%)

*Incluída neste grupo a fístula de líquido cefalorraquidiano espontânea

Tabela 3
Estirpes isoladas nos exames culturais realizados.

Estirpe isolada	Número (%) de doentes
<i>Staphylococcus aureus</i>	1 (12.5%)
<i>Pseudomonas aeruginosa</i>	1 (12.5%)
<i>Klebsiella pneumoniae</i>	1 (12,5%)
<i>Aspergillus sp.</i>	2 (25%)
<i>Mucor</i>	1 (12,5%)
<i>Schizophyllum sp.</i>	1 (12,5%)
Exame cultural negativo	4 (50%)

Note-se que em determinadas amostras foi isolada mais do que uma estirpe. As percentagens foram calculadas com base no total de doentes submetidos a exame cultural (n=8).

Durante o período de *follow-up*, foram registadas 3 mortes (15.8%): doente com rinossinusite fúngica invasiva, 10 dias após a cirurgia, por epistáxis maciça; doente com metástase de carcinoma urotelial, 16 dias após a cirurgia, por progressão da doença de base; doente com metástase de carcinoma folicular da tiróide, 30 meses após a cirurgia, por progressão da doença de base.

Discussão

As lesões isoladas do seio esfenoidal são raras, representando <3% das lesões sinusais e <0.05% das neoplasias malignas dos seios perinasais.^{2,10} Historicamente, o seio esfenoidal era amplamente negligenciado, por constituir uma área anatómica de difícil acesso e por cursar com semiologia frustrante e de instalação insidiosa que atrasava o diagnóstico.¹¹ Wyllie *et al.* publicaram, em 1973, uma das primeiras grandes séries de lesões isoladas do seio esfenoidal com apenas 63 casos recolhidos no decurso de 37 anos.⁸ Em consonância com a crescente disponibilidade de modalidades de imagem como a TC e a RM, tem vindo a verificar-se um número crescente de casos reportados. Cakmak *et al.*, em 2000, completou a série anteriormente publicada por Wyllie *et al.*, para formar a maior série disponível na literatura inglesa até à data, com 182 doentes.⁹ Na amostra estudada, a patologia inflamatória representou a causa mais frequente de

lesões isoladas do seio esfenoidal (57.9%), em concordância com a literatura que mostra uma prevalência de 61% a 80%.^{1,2,4} Nas mais recentes séries publicadas, a rinossinusite crónica sem pólipos nasais representa 28.3% dos casos, seguida do mucocelo (20.3%), da sinusite fúngica (12.5%) e da rinossinusite crónica com pólipos nasais (3.4%).⁷ Na nossa amostra, no grupo das patologias inflamatórias, a sinusite fúngica representou a entidade mais frequentemente diagnosticada, com o mucocelo a constituir apenas 5.3% da amostra. A discrepância apresentada poderá ser imputada a uma amostra com um número reduzido de participantes.

No grupo da patologia neoplásica, as neoplasias malignas foram identificadas numa prevalência superior à das neoplasias benignas (27% e 18%, respetivamente), em concordância com a literatura.^{4,7,8} Lawson *et al.*, em 1987, e posteriormente Cackmak *et al.*, em 2000, mostraram uma prevalência superior das neoplasias malignas primárias comparativamente à doença secundária metastática.^{4,9}

Contudo, analisando a amostra apresentada, as neoplasias malignas esfenoidais ocorreram exclusivamente por doença metastática.

As fístulas de líquido cefalorraquidiano representam 4.1¹² a 8%³ das lesões isoladas do seio esfenoidal. No presente estudo, foi incluído apenas um caso de fistula de líquido cefalorraquidiano numa doente sem história prévia de cirurgia nasossinusal ou traumatismo cranioencefálico.

A cefaleia foi o sintoma de apresentação clínica mais frequente, estando presente em 38.9% dos doentes. Num trabalho apresentado por Moss *et al.*, e que constitui até à data uma das revisões mais representativas com 1133 doentes, os autores demonstraram uma prevalência de cefaleia de 71.4%, não sendo possível estabelecer uma associação entre o diagnóstico e a localização da cefaleia.⁷

A maioria das séries reportadas revela uma prevalência superior de neuropatias cranianas nas lesões neoplásicas.

Friedman *et al.* demonstraram o compromisso

de pares cranianos em 50% dos doentes com diagnóstico de neoplasia esfenoidal comparativamente a 8% dos doentes com patologia inflamatória.³ Wang *et al* reportaram alterações visuais em 26% dos doentes com patologia benigna, comparativamente a 50% daqueles com diagnóstico de malignidade.² A diplopia e a diminuição da acuidade visual, por envolvimento dos nervos oculomotor e óptico, respetivamente, constituem os défices mais frequentemente reportados.⁷ A amostra apresentada demonstra resultados similares, com as neuropatias cranianas a ocorrerem exclusivamente no grupo das neoplasias malignas.

Brook demonstrou uma prevalência superior do *S. aureus* na sinusite esfenoidal aguda, com os aneróbios e os bacilos gram-negativos a representarem as estirpes mais comuns nas formas crónicas.¹³ Apesar da variedade de estirpes isoladas na sinusite fúngica, o *Aspergillus sp.* surge como o organismo mais frequentemente isolado¹⁴, conforme verificado na amostra estudada. Contudo, o reduzido número de exames culturais realizados, não permite aos autores extrapolar resultados com fiabilidade. Em 4 doentes, incluindo um com rinosinusite crónica sem pólipos nasais e três com micetoma esfenoidal, o exame cultural foi negativo. No primeiro caso, o exame bacteriológico negativo poderá ser justificado por antibioterapia realizada previamente à colheita. Nos restantes, perante os achados imagiológicos e intraoperatórios altamente sugestivos do diagnóstico de micetoma esfenoidal, os resultados poderão corresponder a falsos negativos, por amostra inadequada ou por se tratarem de agentes de crescimento lento e fastidioso.

A TC representa uma ferramenta diagnóstica fundamental, particularmente em doentes com endoscopia nasal sem alterações. Perante erosão óssea ou lesão expansiva, sobretudo se existir a suspeita de extensão intracraniana ou orbitária, o estudo deverá ser complementado por RM.¹⁵

Conclusão

A patologia isolada do seio esfenoidal constitui uma entidade rara que se acompanha de sintomas inespecíficos e de curso insidioso. O diagnóstico precoce assenta num elevado índice de suspeição, complementado pela utilização criteriosa de estudos de imagem. A intervenção cirúrgica precoce, com intuito diagnóstico ou terapêutico, está geralmente indicada. A cirurgia endoscópica nasossinusal é segura e eficaz, sendo a modalidade cirúrgica mais adequada na maioria dos casos.

Conflito de Interesses

Os autores declaram que não têm qualquer conflito de interesse relativo a este artigo.

Confidencialidade dos dados

Os autores declaram que seguiram os protocolos do seu trabalho na publicação dos dados de pacientes.

Proteção de pessoas e animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estão de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos diretores da Comissão para Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

Política de privacidade, consentimento informado e Autorização do Comité de Ética

Os autores declaram que têm o consentimento por escrito para o uso de fotografias dos pacientes neste artigo.

Financiamento

Este trabalho não recebeu qualquer contribuição, financiamento ou bolsa de estudos.

Disponibilidade dos Dados científicos

Não existem conjuntos de dados disponíveis publicamente relacionados com este trabalho.

Referências bibliográficas

- 1 – Grillone GA, Kasznica P. Isolated sphenoid sinus disease. *Otolaryngol Clin North Am.* 2004 Apr;37(2):435-51. doi: 10.1016/S0030-6665(03)00160-9.
- 2 - Wang ZM, Kanoh N, Dai CF, Kutler DI, Xu R, Chi FL.

et al. Isolated sphenoid sinus disease: an analysis of 122 cases. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2002 Apr;111(4):323-7. doi: 10.1177/000348940211100407.

3 - Friedman A, Batra PS, Fakhri S, Citardi MJ, Lanza DC. Isolated sphenoid sinus disease: etiology and management. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2005 Oct;133(4):544-50. doi: 10.1016/j.otohns.2005.04.023.

4 - Lawson W, Reino AJ. Isolated sphenoid sinus disease: an analysis of 132 cases. *Laryngoscope*. 1997 Dec;107(12 Pt 1):1590-5. doi: 10.1097/00005537-199712000-00003.

5 - Sethi DS. Isolated sphenoid lesions: diagnosis and management. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 1999 May;120(5):730-6. doi: 10.1053/hn.1999.v120.a89436.

6 - Martin TJ, Smith TL, Smith MM, Loehrl TA. Evaluation and surgical management of isolated sphenoid sinus disease. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2002 Dec;128(12):1413-9. doi: 10.1001/archotol.128.12.1413.

7 - Moss WJ, Finegersh A, Jafari A, Panuganti B, Coffey CS, DeConde A. et al. Isolated sphenoid sinus opacifications: a systematic review and meta-analysis. *Int Forum Allergy Rhinol*. 2017 Dec;7(12):1201-1206. doi: 10.1002/alr.22023.

8 - Wyllie JW 3rd, Kern EB, Djalilian M. Isolated sphenoid sinus lesions. *Laryngoscope*. 1973 Aug;83(8):1252-65. doi: 10.1288/00005537-197308000-00010.

9 - Cakmak O, Shohet MR, Kern EB. Isolated sphenoid sinus lesions. *Am J Rhinol*. Jan-Feb 2000;14(1):13-9. doi: 10.2500/105065800781602993.

10 - Beton S, Basak H, Ocak E, Kucuk B, Yorulmaz I, Meco C. How often does isolated sphenoid sinus disease turn out to be a neoplasm? *J Craniofac Surg*. 2016 Jan;27(1):41-3. doi: 10.1097/SCS.00000000000002176.

11 - Levine H. The sphenoid sinus, the neglected nasal sinus *Arch Otolaryngol*. 1978 Oct;104(10):585-7. doi: 10.1001/archotol.1978.00790100039008.

12- Neyt P, Jorissen M. Diagnosis of isolated sphenoid lesions. *B-ENT*. 2009;5(4):213-24.

13 - Brook I. Bacteriology of acute and chronic sphenoid sinusitis. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2002 Nov;111(11):1002-4. doi: 10.1177/000348940211101109.

14 - Montone KT, Livolsi VA, Feldman MD, Palmer J, Chiu AG, Lanza DC. et al. Fungal rhinosinusitis: a retrospective microbiologic and pathologic review of 400 patients at a single university medical center. *Int J Otolaryngol*. 2012;2012:684835. doi: 10.1155/2012/684835.

15 - Fawaz SA, Ezzat WF, Salman MI. Sensitivity and specificity of computed tomography and magnetic resonance imaging in the diagnosis of isolated sphenoid sinus diseases. *Laryngoscope*. 2011 Jul;121(7):1584-9. doi: 10.1002/lary.21828.